

## Tail sign이 관찰되지 않는 몰입성 하마종: 증례보고 및 문헌 고찰

오태경<sup>1)</sup>, 차인호<sup>1)</sup>, 한승용<sup>2)</sup>, 조은애산드라<sup>2)</sup>, 남웅<sup>1)\*</sup>

<sup>1)</sup>연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

<sup>2)</sup>연세대학교 치과대학 구강병리학교실

〈Abstract〉

### Plunging Ranula without Tail Sign: A Case Report and Literature Review

Tae-Gyeong Oh<sup>1)</sup>, In-ho Cha<sup>1)</sup>, Seung-Yong Han<sup>2)</sup>, Eunae Cho<sup>2)</sup>, Woong Nam<sup>1)\*</sup>

<sup>1)</sup>Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Yonsei University College of Dentistry, 50-1 Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul, Republic of Korea

<sup>2)</sup>Department of Oral pathology, Yonsei University College of Dentistry, 50-1 Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul, Republic of Korea

Plunging ranula is a mucous retention cyst with extension below to the mylohyoid muscle. It can occur by an extravasation of saliva from the salivary gland due to trauma or obstruction of the duct. Fluid from the obstructed gland penetrate through the defect of mylohyoid muscle or through the posterior edge of mylohyoid muscle, and spreading to the cervical area. The “tail sign” has been widely reported as pathognomonic for their diagnosis. It indicates the communication between the collapsed sublingual and submandibular space over the posterior edge of the mylohyoid muscle. In this case, in addition to simple ranula in the right floor of mouth, MRI findings showed homogeneous contrast enhancement in front of the right cervical carotid artery and in the deep part of sternocleidomastoid muscle, but tail sign was not observed. Therefore it was clinically diagnosed as a branchial cleft cyst and was removed through surgical procedure. As a result of the final pathologic biopsy, the lesion, which has been suggested to be simple ranula in the floor of mouth, was diagnosed as reactive pyogenic granuloma, and the cervical lesion was diagnosed as a plunging ranula. This is a case report in which these two lesions are decided to have been separated from one before surgery. This report indicate that plunging ranula can be observed without tail sign and how to make an accurate diagnosis of plunging ranula by reporting misdiagnosis case.

**Key words:** Plunging ranula, Submandibular gland, Mucous retention cyst, Mylohyoid muscle, Tail sign

## I. INTRODUCTION

하마종은 타액선 분비도관의 파열로 점액이 저류하며 생기는 가성 점액낭종으로 주로 구강저에서 발생한다. 하마종은 이환 범위에 따라 단순 하마종(simple ranula)과 몰입성 하마종(plunging ranula)으로 분류할 수 있다. 대부분의 하마종은

구강저에 국한되어 표재성으로 나타나는 단순 하마종에 해당된다. 제2세열 낭종은 MRI나 CT 소견상 내경동맥의 외측, 악하선 후방부에서 흉쇄유돌근의 전연을 따라 조영증강되는 난원형의 낭성 경부 종물로 관찰된다.<sup>1)</sup> 본 증례는 우측 구강저의 하마종과 이와는 별개로 MRI 소견상 우측 경부 경동맥 앞 및 우측 흉쇄유돌근 심부의 균질한 조영증강이 관찰되었으나 몰입성 하마종에서 주로 관찰되는 특징인 tail sign이 관찰되지 않아 임상적으로 제2세열 낭종으로 진단하여 수술 시행하였다. 최종 병리조직 검사 결과 단순 하마종으로 추정되는 병소는 만성 육아조직으로 진단되었고 세열낭종으로 추정되는

\* Correspondence: Woong Nam, Department of Oral Pathology, Yonsei University College of Dentistry, 50-1 Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul, Republic of Korea

Tel: +82-2-2228-8744

Email: omsnam@yuhs.ac

ORCID: 0000-0003-0146-3624

Received: July, 26, 2022; Revised: August, 05, 2022; Accepted: August, 12, 2022

병소에서는 악하선의 점액 저류낭이 관찰되며, 몰입성 하마종으로 최종 진단되었다.

이 두 병소는 수술 전 한 개의 병소였을 것으로 생각되며 술전 하마종으로 진단했던 만성 육아조직은 몰입성 하마종의 일부에 해당되는 주변의 반응성 조직으로 판단되는 증례에 대한 보고이다.

## II. CASE REPORT

2022년 5월 36세 남성 환자는 우측 악하부에 부은 부분이 예전과 달리 물을 많이 마셔도 가라앉지 않아 을지대병원에서 본원 구강악안면외과로 의뢰되었다. 특기할 만한 의과적 병력은 없었으나, 2005년에 대전 을지대병원에서 설소대 절제술을 받은 이후 2010년부터 서울대병원에서 하마종으로 추정되는 병소가 간헐적으로 발생하여 치료받은 치과적 병력이 있었다. MRI 촬영 결과 우측 경동맥 전방으로 균질한 조영증강을 보이는 명확한 경계를 가진 22×31×67mm 크기의 낭성 병소가 흉쇄유돌근 심부에서 관찰되었으며, 우측 악하선 도관의 심한 확장이 관찰되었다(Fig. 1A, 1B). 구강저 전방부에서는 악하선 도관 개구부 파열로 의심되는 소견이 관찰되었다(Fig. 2A, 2B).

하마종은 구강저에서 발생하는 낭종 또는 낭형태의 종물이며 투과성의 푸른빛이 도는 돔모양의 부종으로 관찰된다. 초진시, 우측 구강저의 단순 하마종으로 보이는 종창에 대해 흡인 실시하여 10cc의 투명한 액체가 배액되었다. 악하부의 경미한 종창은 있었으나 목 부위에서는 림프절 증대나 유의할 만한 종창은 관찰되지 않았다.

몰입성 하마종은 설하공간을 지나 경부에 종물이 나타나는 경우로 전형적인 MRI나 CT 소견상 병소가 악설골근을 통과하여 설하공간과 악하공간에 걸쳐 있는 것으로 보이는 tail sign이 관찰되나 본 증례에서는 악설골근을 기준으로 상부 병소와 하부 병소가 명확하게 분리되어 있었으며 우측 경부 경동맥 앞 및 우측 흉쇄유돌근 심부에서 난원형의 종괴가 관찰되었다. 새열낭종은 감염이 없을 경우, 거의 증상이 나타나지 않으나 감염이 동반될 경우, 염증이 생겨 부종을 동반하며 낭종이 커져 발견되는 경우가 많다.

MRI상 tail sign이 관찰되지 않는 점과 병소의 위치를 바탕

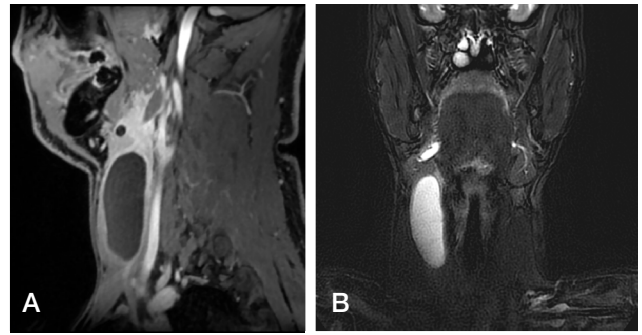


Fig. 1. Magnetic resonance imaging(MRI) of the patient, Sagittal view(A) and coronal view(B) show homogeneously attenuated and well-defined cystic lesion about 22×31×67mm sized in front of the right carotid artery, and enlargement of Wharton's duct.

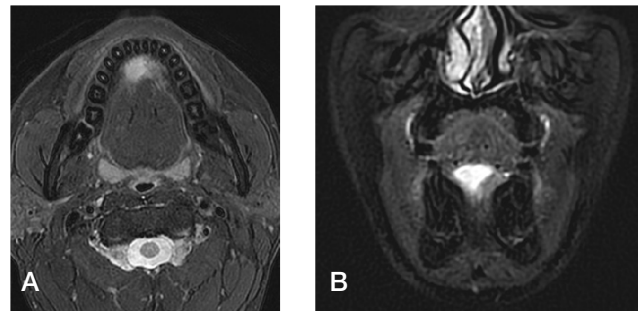


Fig. 2. Magnetic resonance imaging(MRI) of the patient, In the anterior part of floor of mouth, axial view(A) and coronal view(B) show a suspicious finding of ruptured duct orifice of right submandibular gland.

으로 수술 전 경부 병소를 악하선 도관 개구부 파열로 인한 감염으로 생긴 우측 Type II 새열낭종으로 진단하고 전신마취 하 단순 하마종으로 보이는 종창에 대해 조대술 및 새열낭종에 대해 종괴 절제술 계획하였다.

2022년 5월 23일 전신마취 하 조대술 및 종괴 절제술을 시행하다. 새열낭종으로 보이는 병소의 접근을 위해 경부의 수평 절개를 가한 후 넓은목근판 박리를 하여 종괴 절제술 시행하였다. 술 중 병소는 22 x 31 x 65mm의 종물이었으며 주위 조직과 경계가 명확하게 분리되는 양상이었다(Fig. 3).

조직검사 결과 상 경부에 발생한, 새열낭종으로 추정했던 병소는 내강에 이장 상피가 없는 가성낭성 공간이었으며 섬유조직으로 둘러 쌓여 있었다(Fig. 4A). 섬유 조직 벽에는 국소적으로 대식세포들의 응집이 관찰되었다(Fig. 4B). 내강 내부에는 거품대식세포들과 만성 염증세포가 점액성 물질 내 산재



Fig. 3. Excised lesion of the patient.

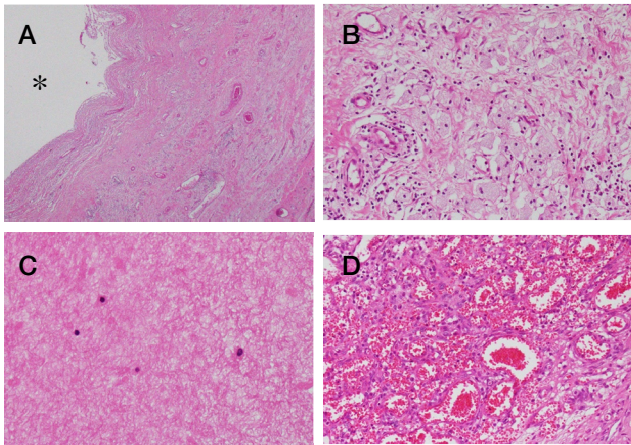


Fig. 4. Histopathologic examinations of the biopsy specimens, cervical lesion(A, B, C), mouth floor lesion(D) with hematoxylin and eosin (H&E) staining.

- A. A pseudocystic space within fibrocollagenous tissue(lumen: asterisk, original magnification:  $\times 12.5$ ).
- B. Aggregation of foamy macrophages and inflammatory cells at the interface of the lumen(original magnification:  $\times 100$ )
- C. Foamy macrophages and inflammatory cells dispersed in mucinous liquid within the lumen(original magnification:  $\times 200$ )
- D. Prominent vascular proliferation with acute and chronic inflammatory cells infiltrates(original magnification: D,  $\times 100$ )

되어 있었다(Fig. 4C). 하마종으로 추정했던 구강저 병소에서는 부종과 섬유성 기질 배경에 혈관의 증식이 관찰되었으며, 혈관 사이 사이로 만성 염증 세포의 침윤이 동반되었다(Fig. 4D). 이러한 조직검사 결과를 토대로 새열낭종으로 추정했던 경부 병소는 물입성 하마종으로 진단하였으며, 하마종으로 추

정했던 구강저 병소는 반응성으로 만성 육아조직으로 진단하였다.

환자의 개인적 이유로 본원에 잦은 내원을 할 수 없다 하여 추후 경과 관찰을 주기적으로 할 수 없다는 문제점이 있었다. 따라서 병소의 재발을 막기 위해 증상이 계속 나타나는 악하선의 완전 절제술을 2022년 6월 3일 전신마취 하 시행하였다. 조직검사 결과, 경미한 수준의 도관염을 지닌 정상 악하선으로 드러났다. 수술 후 2주간 외래 추적 관찰상 특이할 만한 합병증 및 재발 소견 없이 안정적인 상태를 보였다.

### III. DISCUSSION

점액의 관외유출은 타액관의 막힘과 그로 인한 샘파리(acini)의 파괴로 생긴다.<sup>2)</sup> 따라서 타액관의 기형과 타액관의 막힘을 가능케하는 외상이나 염증 등이 하마종을 생성한다고 생각되었다. 물입성 하마종은 설하선 도관에서 삼출된 점액이 악설골근의 틈새를 통해 또는 후면으로 빠져나와 악하공간 및 경부까지 확산되어 발병할 수 있다고 알려져 있다. 이렇게 경부로 확산되는 이유는 악설골근 높이 에서 측인두간극에 설하간극과 악하간극을 분리해주는 근막이 존재하지 않기 때문이다.<sup>3)</sup> 물입성 하마종이 생길 수 있는 기전은 크게 3가지로, 낭종이 악하설골근을 직접 뚫고 나오는 경우, 악하설골근의 결손부를 통해 낭종이 구강내 설하선과 만나는 경우, 설하선관이 악하선관과 합쳐지며 악하선 또는 악하선관과 함께 하마종을 형성하는 경우이다.<sup>4)</sup> 하지만 아주 드물게 악하선에서도 유래할 수 있다고 알려져 있다.<sup>5)</sup> 악하선관 내의 타석을 구강내 접근법으로 제거한 경우나 악하선관의 전위를 시행한 후에 하마종이 발생하였다는 보고도 있어 드물지만 악하선관에 대한 수술적 처치가 물입성 하마종의 원인이 될 수 있다.<sup>6)</sup>

진단은 임상적 병력 청취 및 검사, 영상학적 검사를 기초로 하며 병리 조직학적 검사로 확진한다. 술전에 물입성 하마종에 대한 진단이 쉽지 않은 경우가 많아 종물을 제거하는 술중에 정확한 진단과 치료가 결정되는 경우가 많다.<sup>7)</sup> 컴퓨터 단층 촬영과 자기 공명 영상이 병변의 정확한 위치와 진단에 도움이 되는데 특징적으로 균질한 조영증강을 보이는 악하공간

의 낭종성 종물이 악설골근을 지나 설하 공간으로 돌출되는 양상(tail sign)을 보인다.

본 증례의 경우, 몰입성 하마종의 특징적인 영상 소견인 tail sign 이 관찰되지 않았으며 악설골근의 결손부 또한 관찰되지 않았으나 악설골근을 기준으로 상부와 하부 병소가 명확히 분리되어 있었다. 임상적으로도 상부 병소는 구강저의 푸른 빛을 띠는 돔 모양의 부종으로, 하부 병소는 악하부의 경미한 종창으로 관찰되었다.

악하선관의 타석 제거나 악하선관의 전위 등 악하선관에 대한 수술적 처치가 몰입성 하마종의 원인이 될 수 있지만 구강저의 단순 하마종에 대해 시행한 절개 배농술, 단순 절제술, 조대술로는 악하선관 개구부 외에 유의할 만한 영향을 미치지 않을 것으로 사료되었다.

따라서 임상학적, 영상학적 소견을 종합하였을 때 상부, 하부 병소를 별개의 독립적인 병소로 판단하였고 경부 병소는 발병 위치와 악하선관의 염증 소견을 바탕으로 몰입성 하마종이 아닌 제2새열 낭종으로 진단 후 수술 시행하였다.

몰입성 하마종을 비롯한 점액 저류 현상(mucous retention phenomenon)의 조직 소견은 점액의 저류, 육아 조직 형성, 거품 형태의 대식 세포 등이며, 새열낭종으로 추정했던 경부 병소에 대한 조직 검사 결과가 이에 준하는 소견이었다(Fig. 4A, 4B, 4C). 염증 소견이 미약하며 섬유 조직이 두껍게 형성된 것을 고려하였을 때, 병소가 오랫동안 진행되어 유지되었던 것으로 추정할 수 있었다.

상부 병소가 구강저에 위치해 있다는 점과 악하선에 이상 소견이 없다는 점으로 보아 경부 병소는 악하선보다는 설하선에서 기원한 점액 저류낭으로 추정되고, 따라서 몰입성 하마종으로 판단하였다. 구강저의 상부 병소는 별개의 독립적인 병소가 아닌 타 병원에서 시행한 수차례의 시술로 인해 의원성으로 또는 자연적으로 분리가 된 후 일부 흡수되거나 육아 조직으로 대체된 몰입성 하마종의 일부로 생각된다.

Tail sign이 보이지 않는 병소 중 감별해야 하는 병소로 악하선에서 유래된 점액낭종이 있다. Anastassov는 영상 소견상 tail sign이 관찰되지 않으며 점액낭종이 악하선 조직 안에 있거나 주변 실질조직과 가깝게 위치해 있을 때, 병변의 기원을 악하선으로 추정할 수 있다고 하였지만<sup>9)</sup> 본 증례의 발병 위치

는 홍채유돌근 심부로 악하선으로부터 멀리 위치해있어 영상학적으로도 악하선에서 유래된 점액낭종은 배제할 수 있다.

본 증례를 통해 MRI나 CT 소견상 tail sign 없이도 몰입성 하마종이 나타날 수 있음을 알 수 있다. 몰입성 하마종과 임상, 영상학적 소견이 비슷하여 감별이 필요한 질환들로 새열낭종, 갑상선 낭종, 유피낭종, 설관낭종 등이 있지만<sup>9)10)</sup> 영상 소견상 tail sign 이 관찰되지 않는다는 이유만으로 몰입성 하마종을 진단시 배제할 수 없을 것이다.

몰입성 하마종의 치료로 하마종을 만드는 분비선 조직에 대한 절제 없이 단순절제나 조대술만을 시행하는 경우 재발율이 높다. 재발 횟수가 많을수록 질환은 만성화되고 수차례의 시술로 인해 병변의 의원성 변화가 생길 확률은 높아진다. 따라서 정확한 임상적 병력 청취와 이전 영상, 임상 소견들을 비교 및 종합하여 수술적 처치로 인한 의원성 변화나 만성적 변화 유무를 판단하는 것 또한 중요하며 술전 몰입성 하마종의 진단에 도움을 줄 것이다.

## IV. CONCLUSION

몰입성 하마종은 발생 빈도가 드물며 구강 병소와 관계없이 경부 종물로 나타날 수 있어 정확한 진단과 치료가 쉽지 않으며 늦어질 수 있다. 컴퓨터 단층 촬영이나 자기공명영상 소견이 병변의 정확한 위치와 진단적 가능성에 도움이 되며 tail sign 은 몰입성 하마종의 진단에 있어 가장 주된 특징으로 알려져 있다.

하지만 저자는 본 증례처럼 몰입성 하마종이 tail sign 없이도 관찰될 수 있는 가능성 또한 진단시 배제할 수 없다는 점을 시사하며 술전 진단에 따라 치료 부위, 방법이 상이하게 달라질 수 있기 때문에 술전 정확한 임상적 병력 청취, 검사가 진단학적 도움을 줄 수 있음을 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCES

1. Chandler JR, Mitchell B: Branchial cleft cysts, sinuses, and fistulas. *Otolaryngol Clin North Am* 1981; 14:175-186.
2. de Visscher JG, van der Wal KG, de Vogel PL: The plunging ranula: Pathogenesis, diagnosis and management. *J Craniomaxillofac Surg* 1989;17: 182-185.
3. Michael JS, Kar HY, Nicolas BB : A rare case of an extensive plunging ranula: Discussion of imaging, diagnosis, and management. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;93:743-746.
4. Langlois NE, Kolhe P: Plunging ranula: A case report and a literature review. *Human Pathology* 1992;23: 1306-1308.
5. Peters E, Kola H, Doyle-Chan W : Bilateral congenital oral mucous extravasation cysts. *Pediatr Dent* 1999;21: 286-289.
6. Lee HM, Lee JH, Cho JG, Song JS, Lee SH, Woo JS, Hwang SJ: Clinical analysis of the 22 cases of plunging ranula. *Kor J Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery* 2003;46: 764-768.
7. Ichimura K, Ohta Y, Tayama N: Surgical management of the plunging ranula: A review of seven cases. *J Laryngol Otol* 1996;110:554-556.
8. Anastassov GE, Haiavy J, Solodnik P, Lee H, Lumerman, H: Submandibular gland mucocele: Diagnosis and management. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2000;89(2):159-163.
9. Zafarulla MY: Cervical mucocele (plunging ranula). An unusual case of mucous extravasation cyst. *Oral Surg Oral Med Pathol* 1986;62:63-66.
10. Batsakis JG, McClatchey KD: Cervical ranulas. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1988;97:561-562.

